

症例報告

下咽頭梨状陥凹瘻の1症例

東松 琢郎¹⁾ 國部 勇¹⁾ 高橋 光明²⁾

はじめに

先天性下咽頭梨状陥凹瘻 (congenital pyriform sinus fistula) は、胎生期の鰓管の遺残に由来する疾患であり、多くは急性化膿性甲状腺炎や頸部蜂窩織炎として発症する¹⁾。頸部の反復性炎症の鑑別診断において、本疾患の存在を認識しておくことは重要であり、原因不明のままたずらに切開排膿が繰り返されることも少なくない。

過去に他院で手術を施行されたが再発し、当科において手術的に瘻管を摘出した症例を最近経験した。この症例について、本疾患の診断や手術についての考察を加えて報告する。

症 例

患 者: 15歳男性, 中学生。

主 訴: 発熱, 咽頭痛

現病歴: 約2週間続く発熱と嚥下時に増悪する咽

Key Words: congenital pyriform sinus fistula, branchial remnant, neck abscess, acute suppurative thyroiditis

Congenital pyriform sinus fistula

- A case report -

Takuro Toshio¹⁾, Isamu Kunibe¹⁾,

Mitsuaki Takahashi²⁾

Department of Otolaryngology,

Nayoro City Hospital¹⁾

Department of Otolaryngology,

Asahikawa Red Cross Hospital²⁾

名寄市立総合病院 耳鼻咽喉科¹⁾

旭川赤十字病院 耳鼻咽喉科²⁾

頭痛のため1998年11月24日当科を初診した。

既往歴: 7歳頃に左前頸部痛で他院耳鼻咽喉科を受診し、咽頭の「瘻管」の可能性を指摘された。その後頸部の疼痛、腫脹を数回繰り返した。10歳頃、別の病院で手術を行った。しかし「瘻管の存在は確認できず手術を終了した。」との説明を受けた。手術後、今回の来院までの期間には症状はなかった。

現 症: 咽喉頭鏡では明らかな異常なし。左前頸部の甲状腺の高さの皮膚に手術痕があり、その周囲を中心に圧痛と軽度腫脹が認められた。

血液検査所見: WBC 10,000, CRP 11.3mg/dl (正常0.4以下), 生化学的検査および甲状腺ホルモン値に異常なし。

画像所見: CTおよび超音波断層検査で前頸筋周囲の膿瘍形成を認めた(図1)。食道造影では異常所見なく、バルサルバ法でも瘻管は描出されなかった。

臨床経過: 下咽頭梨状陥凹瘻による頸部膿瘍を疑い、超音波断層検査時に膿瘍穿刺して抗生物質の点滴投与を行った。炎症症状が改善しないため12月2日に膿瘍の切開排膿を行った。全身麻酔下に左前頸部に横切開を加えると膿汁の貯留を認めた。皮下は広頸筋、前頸筋と強く癒着していた。また気管および甲状腺周囲にも強い癒着があったが、膿瘍形成は認められなかった。排膿後は炎症所見は著明に改善した。

1999年1月7日に再度食道造影を行った。左梨状陥凹から前方に向かう瘻管の存在が確認された(図2)。このため3月17日全身麻酔下に瘻管の摘出手術を施行した。

手術所見: 瘻痕部にそって横切開を加えた。

広頸筋、前頸筋、甲状腺左葉は癒着が強く、これ

らの組織をできるだけ剥離しながら、一部は剪刀で切離した。胸鎖乳突筋、総頸動脈、内頸静脈を同定、甲状腺上極で瘢痕組織内の上甲状腺動静脈を結紮切断し、後方で反回神経を同定保存した。肩甲舌骨筋を切断し、頸部食道、咽頭収縮筋を露出した。甲状軟骨を上内側に挙上しながら、経鼻的に梨状陥凹に挿入したネラトンチューブ(8Fr)からインジゴカルミンを注入して梨状陥凹下端から甲状腺上極に向かう瘻孔を確認した(図3)。瘻

孔は長さ約1cm、直径約2mmで、これを結紮切断して摘出した。

病理組織所見：瘻管表面は角化傾向を有する重層扁平上皮で被われ、炎症細胞浸潤は軽度であった。C細胞や甲状腺組織は認められなかった(図4)。

術後経過：術後の経過は良好で、食道造影でも異常は認められなかった。術後約2年間経過して炎症の再発は認めていない。

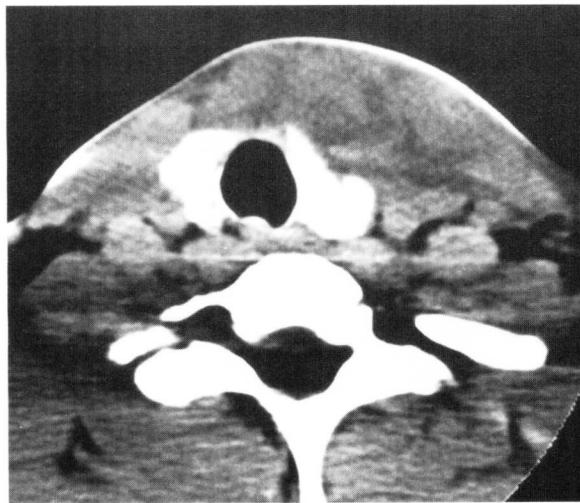


図1 頸部CT

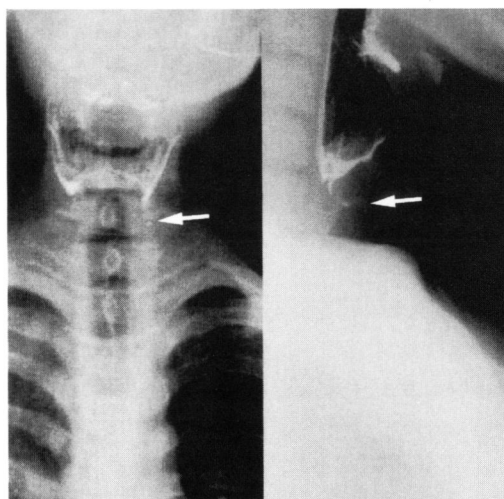


図2 食道造影

矢印は左下咽頭梨状陥凹から前方に向かう瘻孔を示す

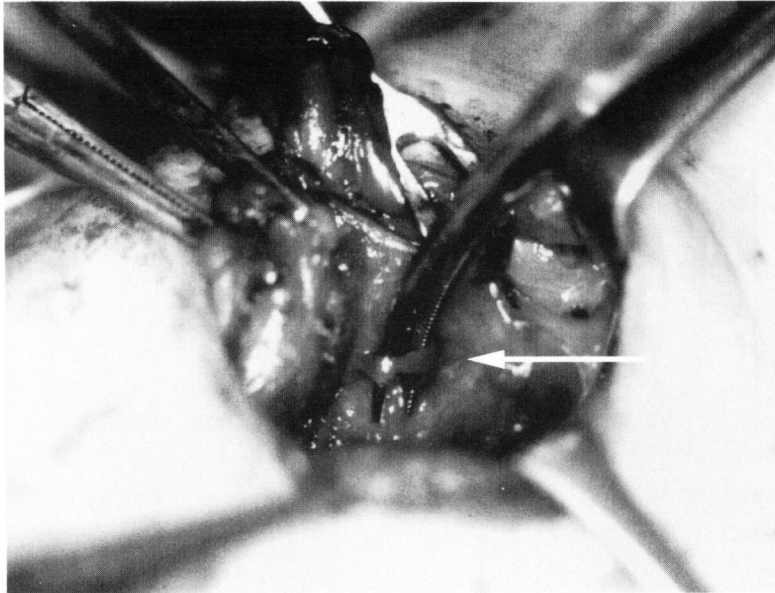


図3 術中所見
矢印はインジゴで青染した瘻管を示す

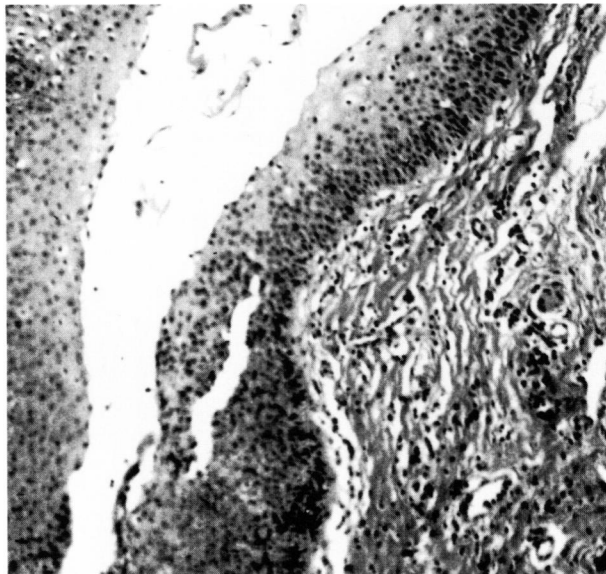


図4 病理組織所見
瘻管表面は角化傾向を有する重層扁平上皮で被われ、
軽度の炎症細胞浸潤を認めた

考 察

1) 成因

先天性下咽頭梨状陥凹瘻は、1979年のTakaiらの報告¹⁾によって広く知られるようになった。疾患概念として新しく、また比較的まれではあるが、急性化膿性甲状腺炎や頸部蜂窩織炎のような合併症を契機に見つかることが多いため、前頸部の反復性炎症の鑑別診断の上で重要である^{2) 3) 4)}。

瘻管は胎生期の鰓管の遺残を起源とし、その発生学的起源としては第3、4、5咽頭嚢が考えられているが明確ではない⁵⁾。第3咽頭嚢は胸線との関連を根拠として最初に提唱された説であるが、解剖学的位置関係から第4咽頭嚢とする説が有力となっている。すなわち第4鰓弓由来の甲状軟骨、上喉頭神経外枝と、第6鰓弓由来の輪状軟骨、反回神経との間に存在することや、下咽頭収縮筋が第4鰓弓由来であることなどがその根拠となっている。しかし最近第5咽頭嚢（鰓後体）由来のC細胞の分布異常が甲状腺内において認められ、その異常が瘻管終末付近に限られている⁶⁾ことや、瘻管の付着する頻度の高い甲状腺上極3分の1付近は、胎生期において鰓後体が甲状腺に癒合する部位に一致することから、本疾患の起源を第5咽頭嚢由来とする説が提唱されている。

2) 疫学

本疾患は比較的若年者に多いが、70歳以上の報告も散見されるため、いかなる年齢層でも発症しうると考えておくべきである⁷⁾。患側は多くは左側であり、Godinら⁸⁾は93%の症例が左側と報告している。

3) 臨床所見

咽頭痛、前頸部左側の腫脹、自発痛、圧痛、発赤や膿瘍形成などの局所所見、発熱、血液検査における白血球、CRP上昇などの全身所見が認められる。過去に原因不明のまま自潰や切開を受けている可能性も考慮しなければならない。またこのような炎症症状は上気道感染に引き続いておこることが多い。

4) 診断

疾患の存在を認識していれば比較的容易である²⁾。喉頭ファイバーで左下咽頭梨状陥凹に瘻管の開口を確認できれば診断は確実となる¹⁾が、一般

には困難なことが多いため、咽頭食道造影が必要となる⁹⁾。しかし炎症の存在下では周囲組織や瘻管の腫脹のため造影剤が瘻管内に進入できず、十分に描出できないこともある。したがって本症例のように消炎後に再確認する必要がある。Skuzara¹⁰⁾も急性炎症期の約2ヶ月後に食道造影を行うべきであると述べている。また甲状腺内の瘻管の確認や、炎症の波及程度を知るためには、CT⁴⁾やMRI検査を行うが、造影剤の内服後でなければ診断的価値は低いとする報告もある^{3) 8)}。シンチグラムの重要性も報告されているが必須ではなく侵襲もなく甲状腺内部や膿瘍の観察に優れている超音波検査をまず施行すべきと考える⁷⁾。

甲状腺ホルモン値は、多くの症例では正常であるが、炎症の程度を知り、他の甲状腺炎と鑑別するために、他の血液検査と併せて測定しておくことは重要である。

5) 治療

急性期には抗生物質の投与、膿瘍の切開排膿によって治療する。根治的治療には保存的治療、外科的治療がある。前者は食道直達鏡下に咽頭側開口部にトリクロル酢酸で焼灼するなどの方法が報告されている¹¹⁾。しかし本疾患は再発しやすく、炎症の反復によってその後の手術は困難となる。我々の経験した症例は過去に「瘻孔」の疑いで他院にて手術を受けているが、この際に瘻孔の同定が出来ずに再発をきたした。故に、手術による完全摘出を治療の原則と考えるべきである²⁾。

6) 瘻孔の同定

大半の症例では炎症を反復しているため、瘢痕組織や肉芽が多く、手術では炎症後の組織中において瘻管の同定に難渋する。そのため過去に数多くの同定方法が提唱されてきた。主なものをまとめると、

- 1) 直達鏡下に梨状陥凹に瘻孔を見つけて、ゾンデやカテーテルを挿入し、術野の目印とする方法。Fogartyカテーテルの報告が多い^{8) 12)}。
- 2) 色素を利用する方法。メチレンブルーやインジゴカルミンを術前に内服したり¹³⁾、術中に梨状陥凹に加圧注入する。
- 3) 下咽頭にガイド光をあてる。
- 4) 解剖学的に甲状腺上極や下咽頭収縮筋付近

で発見する方法.

などの報告がある. 本症例では術中経鼻的に梨状陥凹に挿入したネラトンチューブ (8Fr) からインジゴカルミンを注入して梨状陥凹下端から甲状腺上極に向かう瘻孔を確認することが可能であった. 簡便で患者の苦痛や侵襲が少ないことから, まず試みて良い方法と考えている.

最後に, 術中に反回神経を同定すべきかという問題については賛否が別れ, 必ずしも全例において同定する必要はないとする報告が多い⁸⁾. 本症例では瘻管の同定, 切除は先に述べた方法で可能であったが, 当科の甲状腺手術に準じて反回神経を同定した. 切除範囲が甲状腺に及ぶ場合などには反回神経の同定は重要となり, 症例ごとに反回神経に対処すれば良いと思われる.

お わ り に

1) 下咽頭梨状陥凹瘻の再発例を経験した. 症例は15歳男性で, 頸部の炎症を反復し, 数年前に他院で手術を受けていた.

2) 診断には食道造影が有用で, 急性期に描出されなくても, 消炎後に検査することが重要である.

3) 手術的に瘻管を摘出することが治療の基本である. 術中に梨状陥凹に挿入したカテーテルから, インジゴカルミンを注入することで瘻管同定が可能であった.

文 献

- 1) Takai S, Miyauchi A, Matsuzuka F, et al: Internal fistula as a route of infection in acute suppurative thyroiditis. *Lancet* 1: 751-752, 1979.
- 2) Lee FP: Occult congenital pyriform sinus fistula causing recurrent left lower neck abscess. *Head Neck* 21: 671-676, 1999.
- 3) Miyauchi A, Matsuzuka F, Kuma K, et al: Piriform sinus fistula; An underlying abnormality common in patients with acute suppurative

thyroiditis. *World Surg* 14: 400-405, 1990.

- 4) Nusbaum AO, Som PM, Rothschild MA et al: Recurrence of a deep neck infection: a clinical indication of an underlying congenital lesion. *Arch Otolaryngol Head Neck Surg* 125: 1379-1382, 1999.
- 5) 氷見徹夫: 下咽頭梨状窩瘻の発生源. *JOHNSIO*: 1713-1717, 1994.
- 6) Himi T, Kataura A: Distribution of C-cells in the thyroid gland with pyriform sinus fistula. *Otolaryngol Head Neck Surg* 112: 268-273, 1995.
- 7) 川口信也, 山田弘之, 坂倉康夫, 他: 急性化膿性甲状腺炎の7例. *耳鼻臨床* 85: 1109-1117, 1992.
- 8) Godin MS, Kearns DB, Pranski SM, et al: Fourth branchial pouch sinus: principles of diagnosis and management. *Laryngoscope* 100: 174-178, 1990.
- 9) Tucker H, Skolnick M: Fourth branchial cleft (pharyngeal pouch) remnant. *Trans Am Acad Ophthalmol Otol* 77: 368-371, 1973.
- 10) Skuza K, Rapaport R, Field R, et al: Recurrent acute suppurative thyroiditis. *J Otolaryngol* 20: 126-129, 1991.
- 11) Kim KH, Sung MW, Koh TY, et al: Pyriform sinus fistula: Management with chemocauterization of the internal opening. *Ann Otol Rhinol Laryngol* 109: 452-456, 2000.
- 12) Hirata A, Saito S, Tsuchida Y, et al: Surgical management of pyriform sinus fistula. *Am Surgeon* 50: 454-457, 1984.
- 13) 安部治彦, 井上郁子: 下咽頭梨状窩瘻の1例-術野における同定方法について-. *耳喉頭頸* 72: 348-351, 2000.